

## 갑상선관 낭종에서 발생한 유두상암 1례

아주대학교 의과대학 이비인후과학교실 및 병리학교실\*

고중화 · 박기현 · 이원석 · 박광화\*

### A Case of Papillary Carcinoma Arising in Thyroglossal Duct Cyst

Joong-Wha Koh, Keehyun Park, Won-Suk Lee and Kwang-Wha Park\*

Department of Otolaryngology, Pathology\*, Ajou University School of Medicine, Suwon, Korea

Thyroglossal duct cyst is the most common developmental anomaly of the thyroid and the second most common pathology among childhood cervical masses. They present non-tender palpable mass on midline neck, and they are usually asymptomatic. The cysts are usually benign, but one percent of cases is associated with malignancy. From the world literature, 115 cases of malignant thyroglossal duct cyst are available for review. Despite aspiration cytology and the radiologic images, malignant thyroglossal duct cysts are usually confirmed after surgery.

The authors experienced a case of papillary carcinoma arising from the thyroglossal duct cyst without evidence of local invasion.

**Key Words:** Thyroglossal duct cyst, Papillary carcinoma

## 서 론

갑상선관 낭종은 설맹공에서 갑상선에 이르기까지 갑상선관의 잔유조직이 남아 발생하는 선천성 질환으로 대개 경부정중선에 무증상의 종물을 형성한다. 일반적으로 갑상선관 낭종은 양성종양이나, 1%에서 악성종양의 양태를 나타내는 것으로 알려져있다.

1925년 Ashurst와 White가<sup>8</sup> 갑상선관낭종에서 기원한 악성종양을 첫 보고한 이래 갑상선 잔유조직의 악성변화 가능성에 대한 관심이 높아져 왔다. 본 레에서는 세침흡인세포학적 검사와 같은 일반적인 경부종물에 대한 술전 검사상 별 특이 소견을 보이지 않았고 수술시 얻은 조직내벽의 육안적 소견역시 악성병변이 의심되지 않아 주위조직에 대한 동결절편검사를 시행하지 않고 Sistrunk 술식을 통해 낭종을 제거 하였으나 조직검사소견상 유두상암이 발견되었다. 환자는 5개월 동안

종양의 재발없이 추적 관찰되고 있다. 저자들은 42세 여자에서 발생한 갑상선관 낭종의 유두상암 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

## 증 례

**환 자:** 조○자, 42세, 여자

**초진일:** 1995년 4월 2일

**주 소:** 경부 정중부 종물 (설골 부위)

**가족력 및 기왕력:** 특이 사항 없음

**현병력 및 이학적소견:** 약 1년전 부터 서서히 커지는 설골부위의 무통성 종물을 주소로 본원에 내원하였다. 내원당시 이학적검사상 가로, 세로 각기 4 cm 의 비교적 단단하고 고정된 종물이 설골 직하부에서 촉지되었고 갑상선과 주위 경부의 이상소견은 없었다.

**임상검사 소견:** 심전도, 혈액, 뇨 및 간기능 검사등은 정상범주내에 있었다.

**방사선학적 검사:** 경부 전산화 단층촬영상 설골의 전하방에 주위조직과의 경계가 분명하고 음영이 일정한 낭종이 관찰되었고(Fig. 1), <sup>99</sup>mTc를 이용한 갑상선 동위원소 검사는 정상이었다.

Presented at the 69th Congress of Korean Otolaryngological Society, Seoul, Korea, October 20, 1995.

저자연락처: 고중화, (442-749) 경기도 수원시 팔달구 원천동 아주대학교병원 이비인후과, Tel (0331) 219-5263

갑상선 홀몬 검사소견: 정상

세침흡인세포검사: 악성 세포는 관찰되지 않았다.

수술소견 및 경과: 갑상선관 낭종 진단하에 Sistrunk 술식을 통하여 비교적 용이하게 낭종을 제거하였고 설골 상부로 이행되는 잔유관은 발견되지 않았다. 낭종의

크기는 가로, 세로 각기 3 cm이었고 낭종 외벽의 특이한 육안적 소견은 없었다(Fig. 2). 특별한 합병증 없이 술후 5일째 퇴원하였으나 조직검사소견상 유두상암이 낭종내벽에서 확인되었다. 술후 3개월째 시행한 갑상선 홀몬검사, 갑상선 동위원소 검사상 재발의 소견은 없었다.

병리조직학적 소견: 낭종은 교질(colloid)로 차있었고 낭종의 내면은 단층 입방 세포로 피복되어 있었다. 낭



Fig. 1. Neck CT scan demonstrates a well defined solitary mass in the mid line at hyoid bone level (arrow).

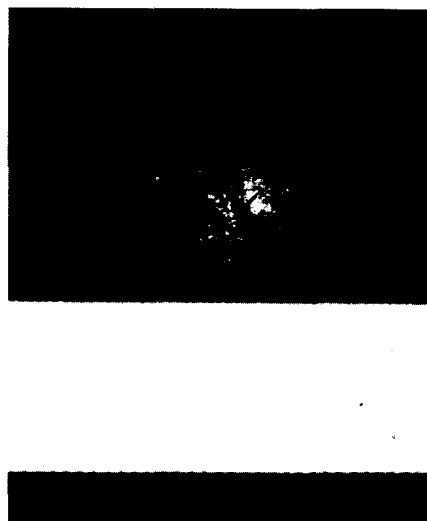


Fig. 2. The surface of the specimen is smooth grossly.



Fig. 3. Photomicrograph shows papillary carcinoma arising from cystic wall, but the cystic wall is not invaded. The cyst is lined with simple columnar epithelium. H & E stain,  $\times 60$ .

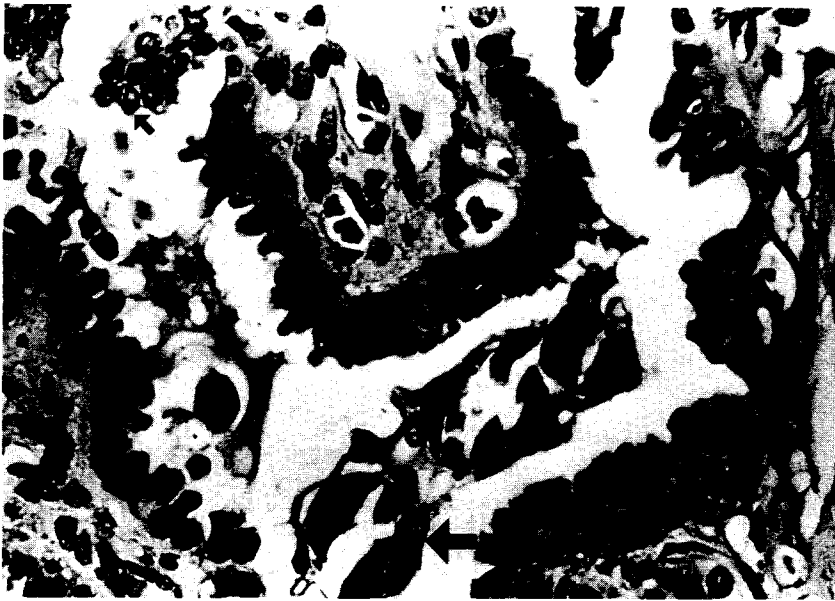


Fig. 4. This photomicrograph illustrates some psammoma bodies (large arrow) and nuclear groove (small arrow), H & E stain,  $\times 600$ .

벽의 일부가 비후되어 있었는데 이는 일부에 위축된 갑상선 여포와 유두상 암종으로 구성되어 있었다. 암종은 주위 연부조직에 침윤되지 않고 갑상선관 낭벽에 국한되어 있었다(Fig. 3). 유두상 구조의 간질에는 혈관과 섬유화가 관찰되었고, 표면은 종양세포로 피복된 유두상 구조였다. 고배율상 관찰에는 다수의 사종체(psammoma body)가 관찰되었고, 종양세포의 핵에 핵구(groove) 및 간유리 모양이 보였다(Fig. 4).

### 고 안

태생학적으로 갑상선은 태생 4주경에 제 1, 2 인두낭의 중앙계실에서 발생되어 두엽으로 나뉘어 경부중앙으로 온다<sup>5</sup>. 이때 생긴 관은 태생 8주에서 10주경에 제 2, 3 새궁에서 설골이 형성되면서 자연퇴화하여 소실된다. 갑상선관이 소실되지 않고 남아, 반복적인 감염으로 인한 관내의 상피조직의 자극이나 상피조직의 분비물의 축적으로 인해 낭종화 될 경우 전경부에 종물을 형성하게 되며<sup>5,13,15</sup> 발병율은 선천성 경부중앙의 약 40%를 차지하며 선천성 새궁낭종의 2배에 달한다<sup>15</sup>. 소아시기에 갑상선관 낭종의 발병율이 높은 것은 감기, 볼거리, 풍진, 편도선염과 같은 상기도 감염의 기회가 많기 때문이라고 설명할 수 있으며<sup>15</sup>, 성별 차이는 다소 차이가 있으나 비슷한 것으로 보고되고 있다<sup>1~7,15,18</sup>.

갑상선관의 내면 상피는 주로 위중층 섬모원주세포 또는 중층 편평상피로 이루어 지나, 드물게는 이행상

피, 입방상피도 나타난다<sup>5~7,15</sup>. 갑상선관 낭종에서 갑상선 조직이 발견 되는 경우는 1% 에서 62% 까지 다양히 보고 되었으나 조직검사시 얼마나 많은 절편을 검사했는가에 따라 달라질 수 있다<sup>17</sup>. 병리조직학적으로 갑상선관 잔유조직에서 악성병변이 발견 되는 경우는 약 1% 정도로 알려져 있고<sup>6,7,12,17</sup> 유두상암이 81.7%, 낭포성 선암이 1.7%, 유두상과 낭포성의 혼합형태의 선암이 6.9%, 상피암이 5.2%, 퇴행성암이 0.9% 등의 비율로 나타난다<sup>3,6,7,17,18</sup>. 호발 연령은 39.2 세이나, 6세에서 81세까지 다양한 분포를 보이고<sup>15</sup>, 경부 종물의 이완기간은 대개 1년 미만이나 그 이상의 경우도 적지 않다<sup>12</sup>. 남녀비율은 약 1:2로 여자에게 많은 것으로 알려져 있다<sup>6,7</sup>. 흥미있는 것은 여자의 경우 호발연령이 30대로서 남자의 경우 50대에 비해 젊은 나이에 발견 된다는 점이다<sup>15</sup>.

갑상선관 낭종에서 발생한 암은 술전에 진단하기가 어렵다. 대부분의 경우, 갑상선관 낭종은 양성이며 단지 갑작스런 종물크기의 증가나 동통 등이 악성변화를 의심할 임상적 소견이므로 술전에 충분한 검사를 시행하지 않고, 고식적 수술방법을 통해 낭종만을 제거했을 경우 주갑상선과 주위조직의 악성가능성을 감별 하지 못하게 된다<sup>18</sup>. 진단은 세침흡인세포검사, 갑상선 동위원소검사 및 기능검사 등을 시행함으로써 주갑상선 조직, 국소적 혹은 전신적 종양의 전이 등을 발견할 수 있다<sup>3~7,12,16</sup>. 갑상선 잔유조직에서 기원한 악성변화의 진단기준은 첫째, 갑상선관 또는 낭종이 확인되어야 하고,

둘째, 주갑상선 조직내의 악성변화가 없어야 한다<sup>18,19</sup>. 본 레에서는 술전에 충분한 검사를 통해 갑상선관 낭종의 악성병변을 배제코자 했으나, 악성세포는 관찰할 수 없었다.

갑상선관의 잔유조직에서 발생한 악성종양은 갑상선에서 발생한 종양에서 전이된 경우와 감별하여야 하는데<sup>3-7,16,18,19</sup>, 병리조직학적으로 이소성 갑상선 조직이나, 갑상선관 잔유조직이 없이 발생한 경우 주갑상선 조직에서 악성세포가 전이된 것으로 설명할 수 있기 때문에<sup>15</sup> 본 레에서는 갑상선에서 유래한 경우가 아닌 것으로 사료된다. 또한 주갑상선에서 발생한 종양이 전이한 경우 암세포의 모양이 갑상선관 잔유조직에서 발생한 경우에 비해 낭포성(cystic)을 띠우는 경향이 있고<sup>13</sup>, 실제로 유두상암은 주갑상선의 아무런 변화없이 전이되어 나타날 수 있는 것으로 알려져 있다<sup>12,18</sup>. 유두상암이 갑상선이 아닌 다른 장소에서 발생하는 원인은 이소성 갑상선 조직의 악성변화 인데, 본환자의 경우 이소성 갑상선 조직이 왜 악성변화를 하였는지는 알 수 없으나 갑상선 잔유조직이 갑상선 홀몬을 형성할 수 있는 태생학적 근거가 있으므로 아마도 갑상선을 닮은 신생물을 형성했기 때문일 것으로 지적되고 있다<sup>15</sup>. 15세 이하의 소아를 대상으로한 보고에서 두경부의 방사선 조사를 악성변화의 원인으로 연관지었다<sup>15</sup>. Nuttal(1965)<sup>14</sup>은 이소성 갑상선 조직이 경부 어떤 곳이라도 유두상암을 발생시킬 수 있다고 하였고 갑상선관이 갑상선암 전이의 자연적 통로라는 보고도 있다<sup>18</sup>.

대부분 종양이 낭종의 내벽에서 발생되기 때문에 낭종 외벽으로의 침범이 드물지만, 주갑상선 조직에 종양이 공존할 경우 경부 임파절 전이의 발생율은 많게는 89.9%까지도 보고 되었다<sup>15</sup>. 따라서 갑상선관 잔유조직의 악성변화가 의심될 경우 주갑상선 및 주위 임파절에 대한 동결절편검사를 시행하여 전이를 감별해야 한다<sup>3-7,9,15-19</sup>. 갑상선에 특별한 종물이 만져지지 않고 술전에 시행한 갑상선 기능검사, 동위원소 검사가 정상이었다면 주갑상선에서의 전이가 아니므로 예방적 성격을 띤 갑상선 전적출술은 의미가 없다<sup>12,15,18,19</sup>.

갑상선관 잔유조직에서 발생한 유두상암을 제거한 후 5년 동안 추적관찰한 보고에 의하면 30.4%에서 갑상선암의 재발의 소지는 없었다<sup>15</sup>. 갑상선관 잔유조직에서 발생한 악성변화는 발생율이 매우 적고 악성변화라는 사실이 대개 술후에 얻어진 조직에 의해 발견되기 때문에 수술 전에 정확한 진단이 어렵고 치료 및 예후 또한 논란의 대상이 되고있다<sup>5-7,15,16,18,19</sup>.

종양이 경부 종양에 위치하기 때문에 림프전이와 좌

우 어느쪽에 있을지 판정하기 어렵고 실제로 예방적 경부 림프절 제거술 역시 의미가 없다<sup>6,7,15,17,19</sup>. 그러나 본 예와 달리 수술시 육안적으로 주위 림프절 비대가 있거나 낭종외벽의 침범이 의심되는 경우, 동결절편검사를 통해 악성 조직으로 판명되면 양측 경부 림프절 제거술을 시행하여야 한다. 또한 갑상선 종양이 발견되어 악성으로 판명되면 즉시 갑상선 전적출술을 시행하여야 한다. 술후 완전한 갑상선 홀몬 투여, 방사선 I<sup>131</sup>, 경부 방사선 치료 등으로 전신적 내분비 대사를 유지하고 갑상선 자극 홀몬의 형성을 억제해서 잔존하는 갑상선 조직의 성장을 방지할 수 있다<sup>6,7,10,15</sup>.

갑상선관암의 예후는 경부 림프절, 원발 병소의 재발이 매우 드물고 완치율이 95%에 이르는 것으로 알려져 있으나<sup>7</sup>, 술후 34년이 지나 갑상선암이 발생한 보고가<sup>15</sup> 있으므로 본 레에서도 장기적인 추적관찰이 필요할 것으로 사료된다.

결론적으로 드물기는 하지만 갑상선관 낭종은 악성변화가 존재할 수 있으므로 술전에 가능한 충분한 검사를 통하여 악성종양을 감별해야 하고 본 레에서와 같이 고식적인 수술을 하더라도 낭종을 파손시키지 않고 제거한 후 내벽을 세심히 관찰하여야 할 것으로 사료된다. 1928년 Sistrunk가 실골의 중심부를 포함하여 낭종이 기시되는 설맹관까지의 갑상선관을 모두 제거하는 술식을 보고한 이래 70년이 지난 현재까지 전이가 없는 갑상선관암의 치료는 이 술식으로 낭종을 제거한후 주기적 추적관찰을 요하고, 갑상선에 종물이 있거나 방사선 치료를 받은 과거력이 있는 경우 또는 경부 림프전이가 의심되는 경우에는 세포조직학적 검사를 통해 전이를 확인하여 갑상선 전적출술 및 경부 림프절 제거술을 시행하여야 한다<sup>3-7,15,16</sup>.

## 결 론

저자들은 최근 주위 조직으로의 침범없이 갑상선관 낭종의 내벽에 국한되어 발생한 유두상암 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

## 참 고 문 헌

1. 강병길, 유향희, 정덕희, 김춘길, 박연훈 및 주양자: 갑상선관 낭종의 임상적 고찰. 한이인지 19(4): 95-99, 1976
2. 김광현 및 홍순관: 갑상선관 기형에 관한 임상적 고찰. 한이인지 30: 960-967, 1987
3. 김광현, 백만기, 이용식, 백정환 및 김용일: 갑상선관 잔유

- 조직에서 발생한 유두상 선암 2례. 한이인지 31: 862-868, 1988
4. 김소현, 이영희, 배홍갑 및 박해수: 갑상선관 잔유조직에서 발생한 유두상 선암 1례. 한이인지 33: 402-406, 1990
  5. 박철규, 장동입, 정운명 및 오천환: 갑상선관 낭종 및 누공의 임상적 고찰. 한이인지 33: 1182-1186, 1990
  6. 최종욱, 정도광 및 백세현: 갑상선관 잔유조직에서 발생한 유두상 선암 2례. 한이인지 36: 1079-1084, 1993
  7. 최홍식, 김창규 및 김명상: 갑상선관 잔유조직에서 발생한 유두상 선암 1례. 임상이비인후과 5(1): 123-128, 1994
  8. Ashurst APC and White CY: Carcinoma in aberrant thyroid at the base of the tongue. J Am Med Assoc 85: 219-220, 1925
  9. Butler EG, Dickey JR and Shill OS: Carcinoma of the thyroglossal duct remnant. Laryngoscope 79: 264-271, 1969
  10. Jaques DA, Chambers RG and Oertel JE: Thyroglossal tract carcinoma. Am J Surg 120: 439-446, 1970
  11. Kaplan HJ and Tamkin JA: Invasive thyroglossal duct carcinoma in childhood. Ear Nose Throat J 68: 460-464, 1989
  12. Livolsi VA, Perzin KH and Savetsky GE: Carcinoma arising in median ectopic thyroid (including thyroglossal duct tissue). Cancer 34: 1303-1315, 1974
  13. Nussbaum M, Buchwald RP and Ribner A: Anaplastic carcinoma arising from median ectopic thyroid (thyroglossal duct remnant). Cancer 48: 2724-2728, 1981
  14. Nuttal FQ: Cystic metastasis from papillary adenocarcinoma of the thyroid with comments concerning carcinoma associated with thyroglossal remnants. Am J Surg 109: 500-503, 1965
  15. Remy HB and Allard JF: The thyroglossal cyst. Head Neck Surg 5: 134-146, 1982
  16. Ronan SG, Deutsch E and Ghosh L: Thyroglossal duct carcinoma: light and electron microscopic studies. Head Neck Surg 8: 222-225, 1986
  17. Trail ML, Zeringue GP and Chicola JP: Carcinoma in thyroglossal duct remnants. Laryngoscope 87: 1685-1692, 1977
  18. Weiss SD and Orlich CC: Primary papillary carcinoma of a thyroglossal duct cyst: report of a case & literature review. Br J Surg 78: 87-89, 1991
  19. Widstrom A, Magusson P and Hallberg O: Adenocarcinoma originating in the thyroglossal duct. Ann Otol 85: 286-290, 1976
-